

Artigo original

Impacto familiar e ajustamento de pais de crianças com diagnóstico de anomalia congênita: influência dos determinantes da criança

Family impact and individual adjustment of parents of children with a diagnosis of congenital anomaly: the influence of the child's determinants

SARA ALBUQUERQUE¹, MARCO PEREIRA¹, ANA FONSECA¹, MARIA CRISTINA CANAVARRO¹

¹ Instituto de Psicologia Cognitiva, Desenvolvimento Vocacional e Social, Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra.

Recebido: 11/1/2012 – Aceito: 13/7/2012

Resumo

Introdução: A ocorrência de diagnóstico pré ou pós-natal de anomalia congênita (AC) num filho pode implicar mudanças na dinâmica e no funcionamento da família, bem como ter um importante impacto no ajustamento individual dos pais. **Objetivos:** Este estudo teve como objetivos avaliar a sobrecarga parental e ajustamento individual de pais de crianças com diagnóstico de AC e compreender a variabilidade da adaptação dos pais (sobrecarga e ajustamento individual) em função dos determinantes da criança. **Métodos:** A amostra foi constituída por 124 participantes (62 casais), pais de crianças com diagnóstico de AC. O protocolo de avaliação incluiu a Escala de Impacto Familiar, o *Brief Symptom Inventory* e o Instrumento de Avaliação de Qualidade de Vida da Organização Mundial de Saúde (WHOQOL-Bref). **Resultados:** As mães reportaram maiores níveis de sintomatologia psicopatológica e menor percepção de qualidade de vida. Encontraram-se, ainda, efeitos significativos dos determinantes da criança, nomeadamente da idade da criança no ajustamento paterno e da percepção de gravidade da anomalia no ajustamento paterno e na sobrecarga materna. O conhecimento do diagnóstico após o nascimento e as anomalias cromossômicas mostraram-se, em ambos os pais, correlacionados com maior percepção de sobrecarga global e financeira. **Conclusão:** Os resultados salientam a complexidade do ajustamento dos pais ao diagnóstico de anomalia congênita de um filho, na qual interagem diversos fatores, em particular os associados com o diagnóstico da criança.

Albuquerque S, et al. / *Rev Psiq Clín.* 2012;39(4):136-41

Palavras-chave: Anomalia congênita, impacto familiar, ajustamento individual, características da criança.

Abstract

Background: The occurrence of a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly may imply changes in the family dynamics and functioning, and may have an important impact on the parents' individual adjustment. **Objectives:** This study aimed to assess the perceived burden and individual adjustment of parents whose child has a congenital anomaly, and to examine the variability of parental adaptation (burden and individual adjustment) as a function of the child's characteristics. **Methods:** The sample comprised 124 parents (62 couples), whose child has a congenital anomaly. The assessment protocol included the Impact on Family Scale, the Brief Symptom Inventory, and the World Health Organization quality of life instrument (WHOQOL-Bref). **Results:** Mothers reported higher scores on psychopathological symptoms and lower scores on quality of life than fathers. A significant effect of child's age in the paternal adaptation was found; the perception of the severity of the anomaly was significantly associated with paternal adjustment and with maternal burden. In both parents, the timing of diagnosis and the type of congenital anomaly were significantly correlated with global and financial burden. **Discussion:** These findings support the complexity of the parents' adaptation when parenting a child with a congenital anomaly, in which several factors interact, particularly those associated with the child's diagnosis.

Albuquerque S, et al. / *Rev Psiq Clín.* 2012;39(4):136-41

Keywords: Congenital anomaly, family impact, parental adjustment, child characteristics.

Introdução

A Organização Mundial de Saúde define deficiência como qualquer “problema nas funções ou na estrutura do corpo, tais como um desvio importante ou uma perda”¹ (p. 13). Nessa definição, enquadram-se as anomalias congénitas (AC), que podem ser definidas como alterações estruturais ou funcionais resultantes de alterações da morfogénese (*in utero*) e que estão presentes no momento do nascimento, e que não são originadas por traumatismos durante o parto².

A existência de uma criança com um diagnóstico de deficiência ou AC na família requer um conjunto de cuidados e exigências que, para os pais, habitualmente os seus principais cuidadores, pode repercutir na deterioração do seu bem-estar³ e qualidade de vida (QdV)⁴, em níveis mais elevados de sobrecarga e vulnerabilidade ao estresse⁵, sentimentos de depressão e tristeza⁶, desvalorização e culpa⁷, bem como sintomas de perturbação de estresse pós-traumático⁸. São também apontadas consequências no domínio do funcionamento físico (*e.g.*, fadiga, exaustão)⁹, das relações sociais (*e.g.*, diminuição das atividades de lazer, alterações nas relações com os familiares) e

económicas (*e.g.*, problemas financeiros)¹⁰. Porém, alguns estudos sugerem que o ajustamento dos pais de uma criança com diagnóstico de deficiência é semelhante ao ajustamento dos pais de uma criança saudável^{5,11}.

A investigação sustenta que a ocorrência de um diagnóstico de deficiência/AC na criança é vivenciada pelos pais de forma distinta. As mães, assumindo o papel de principais prestadoras de cuidados, parecem vivenciar de forma emocionalmente mais intensa a existência de um filho com deficiência, apresentando maiores dificuldades de ajustamento^{12,13}. Já os pais parecem ser mais afetados pelo estigma e impacto social e financeiro da deficiência na família¹⁴.

É reconhecido que diversas características da criança e relativas ao seu diagnóstico se constituem como fatores relevantes no ajustamento parental ao diagnóstico de deficiência/AC de um filho. Relativamente às variáveis sociodemográficas da criança, os estudos têm apontado resultados pouco consistentes; alguns estudos reportam que pais de crianças mais velhas apresentavam melhor QdV¹⁵; outros apontam maior sobrecarga entre as mães de crianças mais velhas¹⁶. Mais recentemente, Lawoko e Soares¹² não encontraram qualquer

relação entre a idade ou o sexo das crianças e os sentimentos de angústia e desesperança parentais.

A investigação tem demonstrado que o tipo de deficiência/AC parece ter papel relevante na adaptação parental^{5,7}. Os estudos sugerem que as deficiências que tendem a ser mais difíceis de lidar são aquelas que exigem maior número de tratamentos, hospitalizações constantes ou cuja gravidade exige cuidados mais especializados por parte dos pais, especialmente das mães, habitualmente as principais cuidadoras¹⁷. Contudo, alguns estudos demonstraram que as percepções dos pais acerca dos efeitos do diagnóstico da criança não correspondem ao que seria de esperar diante do diagnóstico da criança¹⁸. Por exemplo, Yunker¹⁹ salientou que as percepções diferem e não se encontram, globalmente, associadas ao tipo ou à gravidade da deficiência, o que pressuporia a possibilidade de não haver associação entre os indicadores médicos objetivos e o ajustamento dos pais. Assim, mais importante que avaliar as capacidades da criança e o funcionamento familiar com base na gravidade da deficiência seria avaliar os determinantes do impacto da deficiência/AC da criança na família.

Alguns autores salientam ainda algumas especificidades, em função do momento em que o diagnóstico é conhecido. Skari *et al.*²⁰ verificaram que os pais cujo diagnóstico foi conhecido no período pré-natal, comparativamente aos que o conheceram no período pós-natal, apresentavam níveis superiores de ansiedade e depressão. Todavia, outro estudo constatou que uma percentagem significativamente superior de mães que conheceram o diagnóstico no período pós-natal apresentava resultados indicadores de depressão clínica²¹. Segundo Nusbaum *et al.*²², conhecer o diagnóstico no período pré-natal pode aumentar a percepção parental de controle dos acontecimentos. A literatura existente sugere, ainda, a existência de um impacto distinto em função do gênero, destacando que conhecer o diagnóstico no período pré-natal parece ter um efeito mais positivo logo após o nascimento, para os pais, e um efeito mais negativo, cerca de seis meses após o nascimento, para as mães^{23,24}.

Em relação ao tipo de deficiência, são escassos os estudos realizados e os existentes têm mostrado resultados pouco consistentes. Alguns autores demonstraram que os pais de crianças com síndrome de Down apresentavam consequências no seu ajustamento menos intensas do que os pais de crianças com autismo²⁵ ou com atrasos de desenvolvimento de causa desconhecida²⁶. Outros estudos reportaram que os pais de crianças com cardiopatias revelaram respostas cognitivas negativas e problemas psicossociais mais intensos do que pais de crianças com outros diagnósticos, como a fibrose quística²⁷.

Diante do exposto, este estudo tem como objetivos avaliar o ajustamento individual (sintomatologia psicopatológica e QdV) e o impacto familiar (sobrecargas global e financeira) de pais e mães de crianças com um diagnóstico de AC e avaliar a influência dos determinantes da criança no ajustamento individual e sobrecarga parental. De acordo com a revisão da literatura, espera-se que as mães apresentem maiores dificuldades de ajustamento que os pais, assim como percepcionem maior sobrecarga. Espera-se ainda que os determinantes da criança estejam associados ao ajustamento individual dos pais e percepção de sobrecarga, particularmente os seguintes: idade da criança, percepção de gravidade da anomalia, ocorrência e número de hospitalizações, momento do conhecimento do diagnóstico (pré-natal ou pós-natal) e tipo de AC (tendo como referência a classificação da *European Surveillance of Congenital Anomalies* [EUROCAT])²⁸. Em virtude da diversidade e da inconsistência dos resultados dos estudos, não estabelecemos qualquer direção da associação entre as diferentes variáveis e os indicadores de ajustamento individual e impacto familiar.

Método

Participantes

A amostra foi composta por 124 participantes (62 casais), pais de crianças com diagnóstico de AC. Foram considerados os seguintes critérios de inclusão: a) casais que foram pais de uma criança com

diagnóstico de pré-natal ou pós-natal de AC e que estavam casados ou vivendo em união de fato; b) criança com idade inferior a 6 anos; c) idade dos pais superior a 18 anos; d) nível de compreensão adequado para o preenchimento dos questionários.

Instrumentos

Ficha de dados sociodemográficos: incluía os dados sociodemográficos e questões relativas ao contexto familiar/relacional.

Ficha de dados relativos ao diagnóstico: incluía informações sobre as características demográficas e clínicas da criança (tipo de AC, momento do diagnóstico, causas da anomalia, ocorrência e número de hospitalizações). O tipo de AC foi classificado tendo em conta o sistema de classificação da EUROCAT²⁸, que considera anomalias de diferentes sistemas, entre os quais o sistema cardíaco (cardiopatias), o sistema nervoso central, o sistema urinário (uropatias), o sistema respiratório, mas também anomalias dos membros, anomalias orofaciais, anomalias cromossômicas, entre outras. Incluía, ainda, a avaliação da percepção parental acerca da gravidade do diagnóstico ("Qual é a sua opinião acerca da gravidade da anomalia diagnosticada ao bebê?", respondida numa escala analógica visual de 0 = nada grave a 100 = extremamente grave).

Escala de Impacto Familiar (EIF)²⁹. A EIF consiste numa medida do impacto da doença/deficiência da criança na família, que avalia a sobrecarga (impacto familiar global) de uma forma unidimensional. É constituída por 15 itens, respondidos numa escala de resposta de quatro pontos, desde 1 (Discordo muito) a 4 (Concordo muito). De acordo com as recomendações dos autores, um conjunto adicional de quatro itens que avaliam a sobrecarga financeira foi também utilizado. Na presente amostra, o valor do α de Cronbach foi de 0,90 para as mães e 0,92 para os pais. A consistência interna do fator de sobrecarga financeira foi de 0,82 para as mães e de 0,83 para os pais.

Brief Symptom Inventory (BSI-18)³⁰. O BSI-18 é constituído por 18 itens, organizados em três dimensões: Ansiedade, Depressão, Somatização e um índice de gravidade geral (IGG). Os itens são respondidos numa escala de quatro pontos correspondente ao grau em que o indivíduo sentiu os sintomas nos últimos sete dias (entre 0 – Nada – e 4 – Extremamente). Na presente amostra, os valores de consistência interna variaram entre 0,87 (Ansiedade – pais) e 0,91 (Depressão – mães).

World Health Organization Quality of Life – versão abreviada (WHOQOL-Bref)³¹. O WHOQOL-Bref é um instrumento de avaliação da QdV constituído por 26 itens, respondidos numa escala de cinco pontos, que se encontram organizados em quatro domínios: Físico, Psicológico, Relações sociais e Ambiente. Inclui, ainda, uma faceta sobre QdV geral, avaliada por meio de dois itens (QdV em geral; percepção geral da saúde). Resultados mais elevados refletem uma melhor percepção de QdV. Na presente amostra os valores de α de Cronbach variaram entre 0,65 (Psicológico – pais) e 0,80 (Psicológico – mães).

Procedimentos

A amostra deste estudo foi recolhida de dois modos distintos. Primeiro, foi realizado um levantamento das utentes da Maternidade Doutor Daniel de Matos dos Hospitais da Universidade de Coimbra (MDM-HUC), que receberam o diagnóstico de AC no bebê no período pré ou pós-natal, há pelo menos seis meses. Aos casais que preenchiam os critérios de inclusão, foi enviada uma carta solicitando o preenchimento do protocolo de investigação e o reenvio dos protocolos preenchidos para a MDM-HUC. Segundo, foram efetuadas pesquisas em fóruns de debate e partilha sobre a temática e contou-se, ainda, com a colaboração das seguintes associações de apoio a pais de crianças com trissomia 21: Associação Olhar 21, Associação Portuguesa de Portadores de Trissomia 21 e Associação de Viseu de Portadores de Trissomia 21. Aos pais que preenchiam os critérios de inclusão e que mostraram disponibilidade para participar na investigação, foi pedido que enviassem a sua morada, tendo o restante

processo sido realizado de modo semelhante ao das utentes da MDM-HUC. No total, foram enviados 244 protocolos de avaliação (122 casais), tendo 144 retornado preenchidos (taxa de resposta de 59%). Foram excluídos 10 protocolos porque apenas a mãe preencheu os questionários e excluíram-se 10 protocolos referentes a cinco casais cujo filho tinha idade superior a 6 anos.

Todos os participantes foram informados dos objetivos do estudo, tendo sido pedido que respondessem de forma espontânea e sincera e tendo sido assegurados a confidencialidade e o anonimato das respostas aos questionários. O presente estudo foi aprovado pela Comissão de Ética dos Hospitais da Universidade de Coimbra, EPE.

Análises estatísticas

O tratamento estatístico dos dados foi realizado por meio do programa *Statistical Package for the Social Sciences* (SPSS – v. 17.0). Recorreu-se ao teste do qui-quadrado para comparação de dados categoriais e ao teste t de Student para comparação das variáveis de natureza contínua. Recorremos, ainda, à análise multivariada da variância (MANOVA) de medidas repetidas com o gênero como fator intrassujeitos e os indicadores de ajustamento individual e sobrecarga como variáveis dependentes. Quando aplicável, recorreu-se aos testes não paramétricos de Mann-Whitney e de Kruskal-Wallis. Na existência de diferenças significativas, as comparações *post hoc* tiveram em conta a correção de Bonferroni (ajustada para $p < 0,008$). As correlações de Pearson ou de Spearman foram utilizadas para avaliar a associação entre variáveis de natureza contínua. A magnitude dos efeitos foi analisada por meio do d de Cohen e o V de Cramer: efeito pequeno: d de Cohen $\geq 0,20$, V de Cramer $\geq 0,01$; efeito médio: d de Cohen $\geq 0,50$, V de Cramer $\geq 0,03$; efeito grande: d de Cohen $\geq 0,80$, V de Cramer $\geq 0,05$)³².

Resultados

Caracterização sociodemográfica da amostra

Na tabela 1 encontram-se descritas as características sociodemográficas da amostra. Globalmente, os pais tinham uma duração média da relação conjugal de nove anos. Os pais e mães da presente amostra não se distinguiram nas variáveis demográficas, com exceção das habilitações literárias, mais elevadas entre as mães ($p = 0,036$).

Tabela 1. Caracterização sociodemográfica da amostra (n = 62 casais)

	Mães (n = 62)	Pais (n = 62)	t	d de Cohen
	M (DP)	M (DP)		
Idade	34,76 (5,13)	35,21 (6,02)	0,44	0,08
Habilitações literárias	13,33 (3,89)	11,78 (4,09)	-2,12*	0,39
Duração da relação conjugal	8,92 (5,93)		-	-
	n (%)	n (%)	χ²	V de Cramer
Situação profissional				
Empregado	57 (91,9)	58 (95,1)	0,50	0,06
Desempregado	5 (8,1)	3 (4,9)		
Residência				
Rural	28 (45,2)		-	-
Urbano	34 (54,8)			

* $p < 0,05$.

Caracterização das variáveis relativas às crianças

Na tabela 2 encontram-se as características relativas às crianças. Globalmente, estas tinham uma idade média de 25,48 meses ($DP = 18,85$) e eram maioritariamente do sexo masculino (53,3%). O diagnóstico foi conhecido no período pré-natal em 67,7% dos casos

e os diagnósticos mais frequentes foram as uropatias (33,9%). Cerca de 42% das crianças já foram hospitalizadas e o número médio de hospitalizações foi de 1,76 ($DP = 1,23$; amplitude: 1-6). A percepção de gravidade da AC da criança não se distinguiu entre pais e mães, $t_{(117)} = 0,31$, $p = 0,758$ [Mães: $M (DP) = 47,98 (30,36)$; Pais: $M (DP) = 49,71 (30,78)$].

Tabela 2. Caracterização das variáveis relativas à criança (n = 62)

	n	%
Conhecimento do diagnóstico da criança		
Período pré-natal	42	67,7
Período pós-natal	20	32,3
Diagnóstico da criança		
Cromossômicas	11	17,7
Uropatias	21	33,9
Cardiopatias	10	16,1
Outras ^a	20	32,3
Hospitalizações/Internamentos		
Sim	26	41,9
Não	36	58,1

^a Na categoria "Outras" encontram-se crianças com diferentes diagnósticos, incluindo anomalias do sistema digestivo ($n = 5$), anomalias do sistema nervoso central ($n = 2$), anomalias do sistema respiratório ($n = 3$), anomalias dos membros ($n = 5$) e outras anomalias ($n = 5$). Dada a baixa representatividade de cada uma dessas categorias, optou-se pelo agrupamento numa única categoria.

Caracterização do ajustamento e da sobrecarga parental

Em relação à sintomatologia psicopatológica, verificou-se um efeito multivariado do gênero significativo [lambda de Wilks = 0,76, $F_{(3,58)} = 6,08$, $p = 0,001$, $\eta_p^2 = 0,24$]. Os testes univariados mostraram efeitos significativos nas três dimensões e no IGG, verificando-se que as mães apresentam valores mais elevados de sintomatologia psicopatológica (Tabela 3).

Relativamente à QdV, registrou-se um efeito multivariado significativo do gênero [lambda de Wilks = 0,44, $F_{(5,57)} = 14,68$, $p < 0,001$, $\eta_p^2 = 0,56$]. Os efeitos univariados foram significativos para todas as dimensões de QdV. As mães apresentam pior QdV do que os seus companheiros, com exceção do domínio Físico e da Faceta geral.

Quanto à sobrecarga parental, o efeito multivariado não se mostrou significativo [lambda de Wilks = 0,96, $F_{(2,59)} = 1,39$, $p = 0,258$, $\eta_p^2 = 0,05$].

Tabela 3. Caracterização do ajustamento individual e sobrecarga dos pais

	Mães (n = 62)	Pais (n = 62)	F (1, 60)	η_p^2
	M (DP)	M (DP)		
Sintomatologia psicopatológica				
Somatização	0,53 (0,76)	0,34 (0,60)	4,61*	0,07
Depressão	0,74 (0,98)	0,48 (0,71)	6,04*	0,09
Ansiedade	0,93 (0,95)	0,47 (0,65)	18,16***	0,23
IGG	0,73 (0,82)	0,43 (0,59)	11,88**	0,17
Qualidade de vida				
Físico	75,23 (12,85)	69,15 (13,72)	10,47**	0,15
Psicológico	73,52 (14,57)	78,92 (11,97)	6,87*	0,10
Relações sociais	71,91 (17,15)	78,83 (10,81)	11,11**	0,15
Ambiente	65,47 (11,53)	72,58 (14,81)	14,93***	0,20
Faceta geral	72,58 (14,10)	65,93 (12,05)	11,73**	0,16
Impacto familiar				
Sobrecarga global	25,02 (7,76)	24,84 (7,60)	0,05	0,001
Sobrecarga financeira	6,83 (2,90)	7,21 (2,68)	0,09	0,002

* $p < 0,05$; ** $p < 0,01$; *** $p < 0,001$.

Determinantes da criança no ajustamento individual e sobrecarga materna

As correlações entre a idade da criança, a ocorrência e o número de hospitalizações e os indicadores de ajustamento individual e sobrecarga materna não se revelaram significativas. A percepção da gravidade da anomalia não se correlacionou significativamente com o ajustamento individual. No entanto, uma percepção de maior gravidade correlacionou-se significativamente com a maior sobrecarga global e financeira (Tabela 4).

Tabela 4. Coeficientes de correlação entre a idade e a percepção de gravidade da deficiência e os indicadores de ajustamento individual e sobrecarga parental

	Mães		Pais	
	Idade	Gravidade	Idade	Gravidade
Sintomatologia psicopatológica				
Somatização	0,05	0,12	0,10	0,38**
Depressão	0,13	0,15	0,27*	0,35**
Ansiedade	0,13	0,08	0,14	0,35**
IGS	0,12	0,13	0,19	0,39**
Qualidade de vida				
Físico	0,01	-0,07	-0,20	-0,24
Psicológico	-0,09	-0,07	-0,01	-0,19
Relações sociais	-0,02	0,03	-0,30*	-0,39**
Ambiente	-0,13	-0,04	-0,17	-0,42**
Faceta geral	-0,15	0,06	-0,22	-0,32*
Impacto familiar				
Sobrecarga global	0,04	0,36**	0,12	0,27*
Sobrecarga financeira	0,08	0,26*	0,12	0,25

* $p < 0,05$; ** $p < 0,01$.

O ajustamento individual não variou em função do momento do conhecimento do diagnóstico. Porém, a sobrecarga financeira [Mann-Whitney $U = 246,00$, $p = 0,008$] e a global [Mann-Whitney $U = 292,00$, $p = 0,054$] foram mais elevadas quando o diagnóstico ocorreu no período pós-natal.

Não se registraram diferenças nos indicadores de ajustamento individual em função das categorias diagnósticas. Observaram-se, porém, diferenças relativamente à sobrecarga global e financeira (Tabela 5). A maior sobrecarga observou-se nas mães de crianças com doenças cromossômicas e a menor, nas mães de crianças com cardiopatias. Os testes *post hoc* mostraram a existência de diferenças na sobrecarga financeira entre as doenças cromossômicas e as uropatias ($p < 0,001$), entre as doenças cromossômicas e as cardiopatias ($p = 0,002$) e entre as doenças cromossômicas e outras AC ($p < 0,001$). Em relação à sobrecarga global, os *post hoc* não revelaram diferenças significativas.

Determinantes da criança no ajustamento individual e sobrecarga paterna

A maior idade da criança correlacionou-se com uma maior depressão e menor QdV no domínio das relações sociais. A correlação entre a idade da criança e a sobrecarga não foi significativa.

A correlação entre a percepção da gravidade da AC e a generalidade das dimensões avaliadas foi significativa. Uma maior percepção de gravidade paterna correlacionou-se com maior sintomatologia psicopatológica, menor QdV e maior sobrecarga global (Tabela 4). Relativamente à ocorrência de hospitalizações, não se verificaram correlações significativas. Um maior número de hospitalizações mostrou-se positivamente associado à maior somatização ($\rho = 0,42$, $p = 0,037$) e maior sobrecarga total ($\rho = 0,40$, $p = 0,050$).

Quanto ao momento do conhecimento do diagnóstico, não se observaram diferenças nos indicadores de ajustamento individual, mas a sobrecarga global e financeira revelou-se mais elevada quando o conhecimento do diagnóstico ocorreu no período pós-natal [Sobrecarga global: Mann-Whitney $U = 273,50$, $p = 0,036$; sobrecarga financeira: Mann-Whitney $U = 252,50$, $p = 0,014$].

Relativamente às categorias de diagnóstico, apenas se observaram diferenças nas dimensões de sobrecarga (Tabela 5), mais proeminente nas doenças cromossômicas. Os testes *post hoc* mostraram a existência de diferenças na sobrecarga global entre doenças cromossômicas e as cardiopatias ($p = 0,001$). Relativamente à sobrecarga financeira, observaram-se diferenças entre as doenças cromossômicas e as uropatias ($p = 0,001$), entre as doenças cromossômicas e as cardiopatias ($p < 0,05$) e entre as doenças cromossômicas e outras anomalias congênitas ($p < 0,001$).

Discussão

No presente estudo procurou-se conhecer o impacto do diagnóstico de AC de um filho no ajustamento dos pais e examinar a sua variabilidade em função das características da criança. Os resultados sugerem que as mães apresentam um ajustamento individual mais deteriorado, comparativamente aos pais, mas não se verificam diferenças na percepção de sobrecarga associada ao diagnóstico; ao contrário do que acontece com o ajustamento individual, a percepção de sobrecarga materna e paterna surge como uma variável influenciada pelos determinantes da criança.

Globalmente, os resultados deste estudo corroboram os estudos revistos. As mães apresentaram mais dificuldades de ajustamento emocional do que os pais, com níveis mais elevados de sintomatologia psicopatológica e uma QdV inferior. Essas diferenças são congruentes com os resultados de outros estudos^{12,13} e parecem relacionar-se com o papel distinto que cabe às figuras materna e paterna, enquanto prestadores de cuidados. Por assumirem a maior parte dos cuidados à criança¹⁷, as mães experienciam maior fadiga, maior dependência do filho e uma liberdade mais restrita, podendo todos esses aspectos contribuir para um pior ajustamento emocional.

Tabela 5. Comparação da sobrecarga parental em função da categoria diagnóstica

	Cromossômicas (n = 11)	Uropatias (n = 21)	Cardiopatias (n = 10)	Outras (n = 20)	χ^2
Mãe					
Sobrecarga global	30,36 (6,96)	23,62 (6,53)	21,80 (7,79)	25,40 (8,24)	9,35**
Sobrecarga financeira	10,55 (2,94)	6,05 (2,06)	5,50 (2,22)	6,45 (2,44)	17,86***
Pai					
Sobrecarga global	30,45 (5,34)	24,15 (6,82)	18,90 (5,90)	25,40 (8,18)	14,14**
Sobrecarga financeira	10,18 (1,33)	6,90 (2,71)	5,40 (2,12)	6,80 (2,26)	19,06***

** $p < 0,01$; *** $p < 0,001$.

Contrariamente ao esperado, verificou-se que pais e mães têm percepções similares de sobrecarga associada ao diagnóstico. Apesar da participação mais ativa da mulher como prestadora de cuidados e da concepção social do pai como sustentabilidade da família, suscitando maior pressão e responsabilidades financeiras, esses fatores não se refletiram na percepção de sobrecarga associada ao diagnóstico. Esses dados, conjugados com os resultados do ajustamento individual, sugerem que os dois membros do casal tendem a avaliar de forma semelhante o impacto associado ao diagnóstico, embora esse impacto se possa manifestar diferencialmente em termos de ajustamento individual.

O ajustamento parental ao diagnóstico de deficiência/AC de um filho tem sido conceitualizado como o resultado de transações entre múltiplos fatores, entre os quais as características da criança e as percepções parentais³³. Assim, verificou-se que os pais de crianças mais velhas apresentam níveis mais elevados de depressão e pior QdV, especialmente no domínio das relações sociais. As diferenças desenvolvimentais em relação aos seus pares acentuam-se com a idade da criança³⁴, o que poderá intensificar a preocupação desses pais em relação à aceitação social da criança³⁵ e de toda a família¹⁴. Esse fato, aliado à sobrecarga financeira e ao humor depressivo sentidos pelos pais, constitui-se como obstáculo relevante à socialização, podendo resultar em isolamento e, por conseguinte, numa diminuição da sua QdV.

Eram esperadas correlações significativas entre a percepção da gravidade da AC e o ajustamento individual dos pais. Contudo, tal não se verificou em relação às mães. Uma hipótese explicativa desse fato será que, independentemente da gravidade que as mães percebem, a existência do diagnóstico em si tem um grande impacto, por corresponder à perda da criança saudável³⁶. Porém, entre os pais, uma maior percepção de gravidade correlacionou-se com piores resultados na sintomatologia psicopatológica e nos domínios *relações sociais e ambiente*, bem como na *faceta geral de QdV*. Esses resultados podem estar relacionados com o fato de os pais apresentarem maior vulnerabilidade aos estigmas associados à deficiência e uma maior preocupação com o modo como esta poderia influir na imagem, estatuto e relações sociais da família¹⁴. Adicionalmente, para pais e mães, a percepção de gravidade do diagnóstico correlaciona-se positivamente com a percepção de sobrecarga; esses resultados são congruentes com a literatura, uma vez que deficiências percebidas como tendo maior gravidade têm geralmente repercussões maiores nos planos individual e familiar, traduzindo-se numa maior sobrecarga. Porém, dada a natureza correlacional deste estudo, é igualmente possível que pais com maiores dificuldades de ajustamento possam sobrestimar a gravidade do diagnóstico do seu filho. A inclusão de uma avaliação da gravidade da AC baseada em critérios médicos (mais objetiva) pode ser um contributo importante para ajudar a esclarecer essa questão.

O momento em que o diagnóstico foi conhecido apenas influenciou significativamente a percepção de sobrecarga parental, não se registrando diferenças no ajustamento individual. Contrariamente ao observado no estudo de Hunfeld *et al.*²⁴, verificamos níveis superiores de sobrecarga global e financeira maternas e paternas quando o conhecimento do diagnóstico ocorreu no período pós-natal. Nesse período, os pais teriam uma menor percepção do grau de controle e de preparação para lidarem com os acontecimentos circundantes ao diagnóstico da criança²², o que poderá explicar a associação encontrada. Por outro lado, é possível que a qualidade e o acesso aos cuidados pré-natais, fatores frequentemente relacionados com o nível socioeconômico, possam ter influência nos resultados. Por esse motivo, consideramos pertinente que se considerem essas variáveis em investigações futuras.

Relativamente às categorias de diagnóstico, mães e pais registraram piores resultados na percepção de sobrecarga quando a deficiência da criança correspondia a uma anomalia cromossômica. Esses dados vêm reforçar as indicações de que o ajustamento familiar varia em função da categoria diagnóstica da criança. No nosso estudo, as anomalias cromossômicas correspondiam a casos de trissomia 21; em virtude das dificuldades no processo interativo

dessas crianças (e.g., menor vigilância, capacidade de resposta mais reduzida, aparecimento tardio do sorriso), esses pais sofrem de algumas dificuldades de vinculação com os seus filhos³⁷, que podem contribuir para uma percepção negativa inicial da criança e uma maior sobrecarga parental.

Consideramos importante referir algumas limitações desta investigação, que poderão justificar algumas precauções na interpretação dos resultados. O tamanho da amostra e o procedimento de amostragem (conveniência) poderão limitar a generalização das conclusões. Por outro lado, o recrutamento dos participantes por via de serviços de saúde e associações implica que estes se beneficiam de acompanhamento específico; a generalização dos resultados a pais que não se beneficiam desses recursos deve ser cuidadosa. Também a taxa de participação, embora consideremos ser devida ao procedimento utilizado para solicitar a participação no estudo (envio dos questionários por correio, ausência de contato presencial), deve ser um fator a ter em conta no que respeita à generalização dos resultados obtidos. Metodologicamente, a natureza transversal do estudo constituiu também uma limitação, na medida em que não permite fazer inferências quanto à existência de relações causais entre as variáveis estudadas e as variações do ajustamento dos casais ao longo do tempo.

Finalmente, importa fazer uma referência à utilização exclusiva de casais neste estudo (excluindo pais solteiros, divorciados ou viúvos). Apesar de os nossos resultados não poderem ser generalizados a pais com outras situações relacionais, a opção por incluir apenas casais deve-se ao fato de as exigências associadas à monoparentalidade (e.g., pais solteiros) acarretarem um conjunto de desafios e exigências específicas. Essas especificidades podem não ser adequadamente representadas quando incluídas num grupo de pais casados/unidos de fato, tendo em conta que o foco do presente estudo são os determinantes do ajustamento associados à criança, e não os determinantes dos pais.

Assim, pensamos ser relevante a realização de trabalhos com amostras alargadas e mais representativas, com desenhos de investigações longitudinais e a existência de grupo de controle, bem como considerar grupos específicos de pais (e.g., famílias monoparentais). Esses estudos contribuirão para o estudo mais específico e rigoroso do ajustamento parental à deficiência de um filho.

Apesar dessas limitações, consideramos que o presente estudo providencia informação e reflexões interessantes quanto à natureza da sobrecarga parental. Por exemplo, ao identificar os determinantes da criança que podem contribuir para o pior ajustamento emocional dos pais, este estudo potencia, assim, a identificação de grupos mais vulneráveis, o que constitui o primeiro passo para uma intervenção preventiva. Perante os resultados alcançados, consideramos de grande interesse estudar não só as mães, mas também os pais, o que, dada a escassez de estudos que incorporam a perspectiva da figura paterna, releva a importância deste estudo.

Finalmente, os resultados encontrados remetem para a pertinência de uma avaliação compreensiva dos pais que inclua vários indicadores de ajustamento, incluindo os que reflitam a experiência específica associada ao diagnóstico, como a sobrecarga e manifestações emocionais e comportamentais dos pais. Ressalta-se igualmente a importância da identificação de possíveis fatores de risco e/ou de proteção para o desenvolvimento de situações de risco emocional, de forma a permitir a sinalização dos pais que possam estar mais vulneráveis ao desenvolvimento de respostas desadaptativas. Só assim estarão reunidas as condições para uma intervenção eficaz e adequada às necessidades específicas desses pais, com vista a um ajustamento saudável ao diagnóstico dos seus filhos. Por outro lado, dado que no presente estudo constatamos que as mães apresentam, em geral, pior ajustamento, acreditamos que estas, ainda que não negligenciando os pais, devem ser alvo de maior atenção clínica e de maior apoio por parte de estruturas de apoio social e mental.

Agradecimentos

O presente estudo foi desenvolvido no âmbito da linha de investigação Relações, Desenvolvimento e Saúde, da Unidade I&D Instituto

de Psicologia Cognitiva, Desenvolvimento Vocacional e Social (PEst-OE/PSI/UI0192/2011). Marco Pereira é apoiado por uma Bolsa de Pós-Doutoramento da Fundação para a Ciência e Tecnologia (FCT – SFRH/BPD/44435/2008) e Ana Fonseca é apoiada por uma Bolsa de Doutoramento (FCT – SFRH/BD/47053/2008).

Referências

- World Health Organization. International classification of functioning, disability and health. Geneva: WHO; 2001.
- Regateiro F. Manual de Genética Médica. Coimbra: Imprensa da Universidade de Coimbra; 2007.
- Marques MH, Dixe MAR. Crianças e jovens autistas: impacto na dinâmica familiar e pessoal dos pais. *Rev Psiq Clín.* 2011;38(2):66-70.
- Mugno D, Ruta L, D'Arrigo VG, Mazzone L. Impairment of quality of life in parents of children and adolescents with pervasive developmental disorder. *Health Qual Life Outcomes.* 2007;5:22.
- Leung CYS, Li-Tsang CWP. Quality of life of parents who have children with disabilities. *Hong Kong J Occup Ther.* 2003;13(1):19-24.
- Sen E, Yurtsever S. Difficulties experienced by families with disabled children. *J Spec Pediatr Nurs.* 2007;12(4):238-51.
- Pelchat D, Ricard N, Bouchard JM, Perrault M, Saucier J-F, Berthiaume M, et al. Adaptation of parents in relation to their 6-month-old infant's type of disability. *Child Care Health Dev.* 1999;25(4):377-97.
- Cabizuca M, Mendlowicz M, Marques-Portella C, Ragoni C, Coutinho ESF, Souza W, et al. Os pacientes invisíveis: transtorno de estresse pós-traumático em pais de pacientes com fibrose cística. *Rev Psiq Clín.* 2010;37(1):6-11.
- Emerson E. Mothers of children and adolescents with intellectual disability: social and economic situation, mental health status, and the self-assessed social and psychological impact of the child's difficulties. *J Intellect Disabil Res.* 2003;47(4-5):385-99.
- Brandon P. Time away from "smelling the roses": where do mothers raising children with disabilities find time to work? *Soc Sci Med.* 2007;65(4):667-79.
- Lambrenos K, Weindling AM, Calam R, Cox AD. The effect of a child's disability on mother's mental health. *Arch Dis Child.* 1996;74(2):115-20.
- Lawoko S, Soares JJ. Psychosocial morbidity among parents of children with congenital heart disease: a prospective longitudinal study. *Heart Lung.* 2006;35(5):301-14.
- Weinhouse D, Weinhouse M, Nelson JG. Stress factors in families of young children with exceptional educational needs. *School Psychol Int.* 1992;13(1):51-9.
- Batshaw ML, Perret YM. Criança com deficiência. São Paulo: Maltese; 1990.
- Lawoko S, Soares JJ. Social support among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Scand J Occup Ther.* 2003;10(4):177-87.
- Rimmerman I, Duvdevani A. Parents of children and adolescents with severe mental retardation: stress, family resources, normalization, and their application for out-of-home placement. *Res Dev Disabil.* 1996;17(6):486-94.
- Unalan H, Gencosmanoglu B, Akgun K, Karamahmetoglu S, Tuna H, Ones K, et al. Quality of life of primary caregivers of spinal cord injury survivors living in the community: controlled study with short form-36 questionnaire. *Spinal Cord.* 2001;39(6):318-22.
- Simons CJ, Ritchie SK, Mullett MD. Parents' perceptions of medical diagnoses and related issues for their high-risk infants. *J Pediatr Health Care.* 1998;12(3):118-24.
- Yuker HE. Mothers' perceptions of their disabled children: a review of the literature. *J Dev Phys Disabil.* 1988;1(3):217-32.
- Skari H, Malt UF, Bjornland K, Egeland T, Haugen G, Skreden M, et al. Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: a prospective longitudinal cohort study. *Prenat Diagn.* 2006;26(11):1001-9.
- Rona RJ, Smeeton NC, Beech R, Barnett A, Sharland G. Anxiety and depression in mothers related to severe malformation of the heart of the child and fetus. *Acta Paediatr.* 1998;87(2):201-5.
- Nusbaum R, Grubs RE, Losee JE, Weidman C, Ford M, Marazita M. A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *J Genet Couns.* 2008;17(4):336-50.
- Hoehn KS, Wernovsky G, Rychik J, Tian Z, Donaghue D, Alderfer M, et al. Parental decision-making in congenital heart disease. *Cardiol Young.* 2004;14(3):309-14.
- Hunfeld JAM, Tempels A, Passchier J, Hazebroek FWJ, Tibboel D. Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *J Pediatr Psychol.* 1999;24(6):515-20.
- Holroyd J, McArthur D. Mental retardation and stress on the parents: a contrast between Down syndrome and childhood autism. *Am J Ment Defic.* 1976;80(4):431-6.
- Goldberg S, Marcovitch S, MacGregor D, Lojkasek M. Family responses to developmental delayed preschoolers: etiology and the father's role. *Am J Ment Defic.* 1986;90(6):610-7.
- Goldberg S, Morris P, Simmons RJ, Fowler RS, Levison H. Chronic illness in infancy and parenting stress: a comparison on three groups of parents. *J Pediatr Psychol.* 1990;15(3):347-58.
- EUROCAT. EUROCAT guide 1.3 and reference documents: instructions for the registration and surveillance of congenital anomalies. Newtonabbey, County Antrim: EUROCAT Central Registry; 2009.
- Stein REK, Jessop DJ. The impact on family scale revisited: further psychometric data. *J Dev Behav Pediatr.* 2003;24(1):9-16.
- Derogatis LR. The brief symptom inventory-18 (BSI-18): administration, scoring, and procedures manual. Minneapolis, MS: National Computer Systems; 2000.
- WHOQOL Group. Development of the World Health Organization WHOQOL-BREF quality of life assessment. *Psychol Med.* 1998;28(3):551-8.
- Cohen J. A power prime. *Psychol Bull.* 1992;112(1):155-9.
- McCubbin HI, Patterson JM. The family stress process: The double ABCX model of adjustment and adaptation. In: McCubbin HI, Sussman MB, Patterson JM, editors. *Social stress and the family: advances and developments in family stress theory and research.* New York: The Haworth Press; 1983. p. 7-38.
- Barbosa AJG, Oliveira LD. Estresse e enfrentamento em pais de pessoas com necessidades especiais. *Psicol Pesq.* 2008;2(2):36-50.
- Saloviita T, Itälä M, Leinonen E. Explaining the parental stress of fathers and mothers caring for a child with intellectual disability: a Double ABCX Model. *J Intellect Disabil Res.* 2003;47(4):300-12.
- Seligman M, Darling RB. Ordinary families, special children: a systems approach to childhood disability. New York: The Guilford Press; 2007.
- Coutinho MTB. Apoio à família e formação parental. *Análise Psicológica.* 2004;1(XXII):55-64.